

구강운동촉진기술(OMFT)을 적용한 조기 연하재활치료가 프래더 윌리 아동의 섭식 발달에 미치는 영향 - 발달에 근거하여 : 사례 보고

민경철, 김보경*

서울특별시 어린이병원 재활의학과 작업치료실 작업치료사

The effect of Early Feeding Therapy by Oral Motor Facilitation Technique(OMFT) on Feeding development of Prader-Willi Syndrome baby - Based on the Development : Case study

Kyoung-Chul Min, Bo-Kyeong Kim*

Occupational Therapist, Department of Rehabilitation, Seoul Metropolitan Children's Hospital

요약 본 연구는 섭식장애가 있는 프래더 윌리(PWS) 아동을 대상으로 구강운동촉진기술(OMFT) 적용 후 섭식발달의 변화를 확인하고 전반적인 발달과 비교·분석하여 OMFT가 섭식발달에 미치는 효과를 알아보려고 하였다. 대상 아동은 경관 식이로 섭식 중인 교정 연령 8개월 PWS 여자 1명으로 2020년 7월부터 2021년 6월까지 OMFT를 주 1회, 1년 동안 제공하였다. OMFT 적용 후 구강 섭식 전환 및 연령에 맞는 음식 섭취, 씹기 기능 증진, 빨대 사용, SSB 조절 향상 등의 섭식발달 단계 변화가 관찰되었다. 본 연구를 통해 OMFT가 PWS 아동의 섭식 발달 및 구강 섭취 전환에 효과적인 것으로 확인되었다. PWS 아동의 섭식 및 연하장애에 대한 조기 평가 및 치료 접근이 중요하며 근긴장도 및 근력 저하의 구강운동기능 문제 해결을 위한 OMFT 적용을 통한 섭식 발달 향상을 위한 접근이 필요할 것이다.

주제어 : 구강운동촉진기술, 섭식발달, 섭식치료, 연하재활치료, 프래더 윌리 증후군

Abstract Goal of this study is to identify effect of Oral Motor Facilitation Technique(OMFT) on feeding development, tube weaning of PWS baby. Subject was 8months old PWS girl. 2 times of OT, 1 times of OMFT per weeks were provided from July, 2020 to June, 2021. Feeding development and skills was increased and could eat food by mouth after OMFT treatment. Especially, she could eat food by her mouth after 3mts of OMFT and age-appropriated food intake, chewing function, drinking by straw was increased. Through this case study, early detecting and treatment for feeding development of PWS is very important. OMFT is good treatment protocol for increasing feeding development and oral motor skills of PWS.

Key Words : Dyphagia therapy, Feeding disorder, Feeding therapy, Oral Motor Facilitation Technique, Prader Willi Syndrome

*This article is supported by the research grant of Korean Academy of Dysphagia Rehabilitation of 2022

*Corresponding Author : Bo-Kyeong Kim(jellybk@naver.com)

Received November 20, 2021

Revised December 20, 2021

Accepted January 20, 2022

Published January 28, 2022

1. 서론

프래더 윌리 증후군(Prader-Willi syndrome, PWS)은 좁은 얼굴형, 아몬드 모양의 눈, 좁은 콧등, 얇은 윗입술, 작은 손과 발 등이 특징인 15번 염색체 이상으로 발생하는 유전성 희귀질환이다[1,2]. 신생아기와 영아기에는 심각한 근 긴장도 저하, 무기력, 빨기 어려움, 섭식 곤란, 전반적인 발달지연이 두드러지고, 유아기 이후에는 성장호르몬 결핍으로 인한 작은 키, 심각한 과식 행동, 고집이나 강박행동 등의 행동 문제가 특징이다[2-4].

섭식 및 연하장애 문제를 보면 신생아기에는 낮은 근 긴장도로 인한 빨기 능력 저하, 빨기-삼키기-숨쉬기(Suck-swallow-breathe coordination, SSB) 협응 미성숙, 구강 근력 및 구강운동기능 저하, 섭식 문제, 흡인, 경관 식이 등이 나타난다[3,4]. 영유아기 이후에는 음식에 대한 집착, 과식, 충동적 먹기, 먹기 관련 욕구 및 행동 조절 어려움, 구강건강 저하, 수면장애, 낮은 비강호흡률(9%)을 보인다[1,4,5]. PWS 아동의 섭식 및 연하장애는 구강운동기능 저하가 가장 큰 원인이다(60%)[6]. 구강운동장애(90%)[7], 경관식이(90~100%)가 매우 흔하며[8] 섭식 장애, 성장 지연, 언어발달지연, 침흘림 등 다양한 증상이 동반된다[3,9]. Gunay-Aygün 등[3]은 2세 이하에서 저긴장성과 빨기 능력 저하, 12세 이하에서 저긴장성과 빨기 저하 과거력을 주요 진단 기준으로 제시할 정도로 저긴장성과 빨기 능력 저하는 PWS 아동의 연하재활치료 증재의 중요한 요소이며 발달 지연(98.9%), 저긴장성(87.9%), 섭식 문제(77.8%)가 주요 특징으로 확인되었다. 따라서 PWS아동은 출생 후 저긴장성과 섭식 기능 저하 해결을 위한 구강운동치료를 중심으로 한 조기 연하재활치료가 섭식 문제에 대한 도움을 주기 때문에 종합적인 연하장애 평가 및 치료가 필요하다[4,10].

PWS의 주요 임상적 특징 중 하나는 발달지연으로 PWS의 발달 지연 정도가 교정 연령의 절반 정도 수준으로 느리다고 보고되어 연하재활치료 적용 시 중요하게 고려해야 할 부분이다[1]. 아동의 정상 발달 과정은 몸통과 턱의 안정성을 통한 턱의 움직임 향상 및 이유식으로의 전환, 혀 움직임 발달을 통한 혀의 측면 움직임 향상, 사물에 대한 이해, 손 사용 등을 통한 스스로 먹기 발달 등 섭식 발달에 영향을 미친다[11]. 따라서 Table 1의 내용과 같이 섭식 및 구강운동기능 증진을 위한 연하재활 치료와 함께 전반적인 발달을 확인하고

그에 따른 종합적인 접근이 고려되어야 한다[12].

Table 1. Normal and feeding skill development[11,12]

Age (Mts)	Physical development	Feeding skill development
0-3	<ul style="list-style-type: none"> • Head control 	<ul style="list-style-type: none"> • Suckling pattern
3-6	<ul style="list-style-type: none"> • Rolling • Sitting • Palmar grasp 	<ul style="list-style-type: none"> • Sucking pattern • Phasic bite • Attempts to hold bottle
6-9	<ul style="list-style-type: none"> • Sitting • Creeping • Reaching 	<ul style="list-style-type: none"> • Munching and biting • Tongue lateralization • Transfer food from center to the sides
9-12	<ul style="list-style-type: none"> • Crawling • Pull to stand • Pointing 	<ul style="list-style-type: none"> • Diagonal munching • Finger feeding • Straw drinking
12-18	<ul style="list-style-type: none"> • Walking • Pincer grasp • Tool use 	<ul style="list-style-type: none"> • Rotary chewing • Cup drinking • Spoon feeding
18-24	<ul style="list-style-type: none"> • Running • Climbing 	<ul style="list-style-type: none"> • Transfer food from both sides • Self spoon feeding • Self cup drinking

(Case-Smith & O'brien, 2015; Morris & Klein, 2002)

구강운동촉진기술(Oral motor facilitation technique, OMFT)은 구강운동기능 및 섭식 기능 증진을 위해 개발된 종합적인 구강운동치료 프로토콜이다[13,14]. OMFT는 구강운동기능 증진을 위해 고려해야 할 자세, 감각, 구강 얼굴 근육, 도수적 접근, 운동 조절 및 운동 학습의 이론에 근거하여 종합적인 치료 제공이 가능하다. OMFT는 대상자의 기능 및 발달 수준에 따라 감각-운동 단계, 운동요소 통합단계, 구조적 움직임 단계, 기능적 구강 운동 단계, 통합적 구강 운동 단계의 5단계에 맞는 개별적인 접근이 가능하며 연령이 어리거나 의식이 저하된 아동에게도 적용할 수 있는 장점이 있으며 추가적인 워크샵 교육 참여를 통해 기술을 배울 수 있다.

근긴장도 조절, SSB 협응 및 구강운동기능 저하 등 다양한 섭식 문제는 뇌병변 및 희귀질환 아동에게서 흔하며[15], 구강운동치료는 뇌성마비, 다운증후군, 조산 및 영유아 아동의 섭식 및 구강운동기능 증진에 매우

효과적인 방법이며 주요한 치료 목표이다[16,17]. 이는 PWS 아동을 대상으로 구강운동치료를 통한 섭식 및 구강운동기능 향상을 기대해 볼 수 있는 근거가 될 수 있으나 PWS 아동의 연하재활치료 및 구강운동치료의 효과에 대한 연구는 부족한 실정이다. Wang 등[8]은 경관 식이 중인 PWS 신생아 20명을 대상으로 연하치료를 제공하여 대조군에 비해 구강식이 전환 기간을 단축시켜 PWS 아동의 섭식 기능 증진을 위한 조기 개입의 효과를 확인하였다. 그 외의 선행 연구는 영유아기 이후의 섭식 관련 문제 행동에 관련된 치료가 대부분으로 신생아 PWS의 주요 임상 특징과 진단의 기준이 되는 낮은 근긴장도로 인한 빨기 등 섭식 및 구강운동기능 저하에 대한 치료 효과를 확인한 연구는 거의 이루어지지 않고 있다. 또한 PWS는 발달 지연이 특징인 만큼 전반적인 발달 증진을 위한 접근과 동시에 섭식 및 연하장애 증상, 섭식 발달에 대한 이해 및 치료적 접근 역시 중요하다. 특히 희귀질환 아동에 대한 연하재활 연구는 기존 연구들에서 확인할 수 있듯이 집단 연구 설계 및 무작위 추출을 통한 비교 연구가 어려워 대부분 사례 보고 방법을 통해 치료 효과와 반응에 대한 내용을 개별적이고 질적으로 분석하고 있다[18-20].

본 연구의 목적은 PWS 영유아기 아동을 대상으로 OMFT를 활용한 조기 연하재활치료가 구강식이 전환(tube weaning)을 포함한 섭식발달에 미치는 효과에 대해 알아보고 다른 발달 영역과 비교, 분석하여 종합적인 구강운동치료 프로토콜의 효과와 치료 경과에 따른 섭식 발달, 구강운동 기능의 변화 과정을 소개하는 것이다.

2. 본론

2.1 연구대상

2.1.1 일반적 사항

대상 아동은 재태 기간 32주에 1.4kg으로 출생한 PWS 여아였다. 출생 후 신생아 집중치료실에서 젖병 수유를 시도하자 산소포화도가 저하되어 비위관으로 경관 식이를 시작하였다. 섭식 문제, 전반적인 발달지연으로 교정연령 8개월에 작업치료 및 연하재활치료를 시작하였다.

2.1.2 초기 전반적 발달

한국형 덴버 발달 선별 검사(Korean-Denver

Developmental Screening Test, K-DDST II) 시행 결과, 개인 사회성 발달과 미세운동 및 적응발달 3~5개월, 언어발달과 운동발달 3~4개월 수준으로 평가되었다. 아동 앞에 제공된 장난감을 잡으려 하였으나 혼자 과자 먹기는 수행하지 못하였고 건포도를 주목해 보고 팔을 뻗을 수 있으나 털실뭉치 찾기, 건포도 굽어서 쥐기에는 어려움을 보였다. 목소리가 나는 쪽으로 얼굴을 돌릴 수 있으나 큰 소리 내기, 의미 없이 '엄마, 아빠' 하기는 관찰되지 않았다. 앉은 자세에서 머리를 가눌 수 있으나 불안정했고 엎드린 자세에서 머리를 45도 들 수 있었다.

2.1.3 초기 섭식 발달

연하재활치료 내원 사유는 젖병 수유 어려움, 음식 섭취 부족, 대체 먹기 방법 의존(경관 식이)이었다. 초기 연하 평가에서 전반적인 근긴장도는 저하되어 있었으나 볼과 입술 주변 근긴장도 다소 높았으며 얼굴 및 구강 감각은 정상 소견이었다. 구강 구조물의 구조, 기능, 반사는 정상이었다. SSB 협응에서 빨기 반응 제한적이었으며 적극적인 비영양 빨기는 보이지 않았다. 젖병을 혀로 밀어내고 구강으로 호흡하는 등 적응이 어렵고 거부하였다. 구강으로 제한적인 이유식 섭취 가능하여 수저로 이유식 제공 시 자발적으로 입을 벌리는 모습이었으나 보호자 보고에서 전반적으로 음식에 흥미가 없고 자발적으로 먹는 모습은 보이지 않는다고 하였다. 캐나다작업수행측정(Canadian Occupational Performance Measure, COPM)으로 확인한 결과 보호자의 치료 목표는 구강 섭식, 발달에 맞는 섭식, 삼킴 능력으로 중요도는 모두 10점, 수행도, 만족도 모두 1점으로 보고하였다.

2.2 연구도구

2.2.1 한국형 덴버발달선별검사(Korean-Denver Developmental Screening Test, K-DDST II)

K-DDST-II는 미국에서 개발된 Denver II(1990)를 국내 표준화한 평가도구로 0~6세 아동을 대상으로 발달장애를 조기 선별하기 위해 사용된다. 개인사회성 발달, 미세운동 및 적응발달, 언어발달, 운동발달의 4개 영역, 110개의 항목으로 구성되며 아동 관찰과 보호자 인터뷰를 통해 평가한다. 민감도는 90.28%, 특이도는 60.97%였다[21].

Table 2. OMFT Technique

Technique	Classification	Contents
Warming up	2 Categories, 12 skills	Sensory adaptation, Breathing control, Oral preparation, Neck facilitation
Key point	7 Categories, 30 skills	Direct facilitation technique on oral structure(face, cheek, gum tongue, jaw), Chewing
Application	1 Categories, 8 skills	Direct approach for acceptance and swallowing food

2.2.2 캐나다작업수행측정(Canadian Occupational Performance Measure, COPM)

COPM은 작업수행 변화를 알아보기 위한 대상자 중심의 표준화된 평가도구이다. 인터뷰를 통해 일상생활에서 이루어지는 자기관리, 생산 활동, 여가 활동 중 대상자가 직접 선택한 과제 중요도, 수행도 및 만족도를 10점 척도로 평가하며 점수가 높을수록 높음을 뜻한다. 치료 전, 후의 수행도와 만족도의 평균값 차이가 2점 이상의 변화가 있을 경우 유의미한 변화라고 판단한다. 검사-재검사 신뢰도는 .63~.89, 내용 타당도, 기준관련 타당도, 구성타당도를 확인하였다[22].

2.3 중재 방법

구강운동촉진기술(Oral motor facilitation technique, OMFT)은 임상가의 직접적인 자극(stroking)이 포함된 도수적 접근을 통해 구강감각적응, 구강운동 조절 및 학습 기능 향상을 위해 개발된 구강운동 프로토콜이다 [13,14]. 특정 구강 구조물 자극, 단순 감각 자극 또는 운동 접근 등의 방법을 주로 사용하던 이전의 치료법들과 달리 OMFT는 아동의 발달, 구강 해부학을 기본으로 감각(촉각, 고유감각), 구강운동 협응, 호흡 조절, 운동 조절 및 운동 학습으로 이어지는 종합적인 구강운동 치료가 가능하다. Table 2의 내용과 같이 OMFT는 3기법, 10범주, 50기술로 구성되어 있으며 3기법은 준비 기법, 핵심 기법, 응용 기법으로 나뉘며 내용은 다음과 같다. 대상자의 발달 및 기능 수준에 맞는 개별적이면서 체계적인 치료가 가능하며 모든 치료는 20-30분 정도 소요된다. OMFT는 급성기 환자, 영유아 등 의식이 명료하지 않거나 지시 따르기가 어려운 대상자에게도 활용이 가능하며, 임상가가 대상자의 반응을 고려하여 적용할 수 있는 장점이 있다[14]. 본 연구에서는 아동의 발달 및 적응 수준에 따라서 준비 기법을 통한 구강 감각 자극 및 적응, 목 주변 자극, 비강 호흡 훈련을 적용하였다. 연하재활치료는 아동 연하재활치료 경력

19년으로 OMFT를 개발한 한 연구자 1인이 진행하였다. 이후 핵심 기법을 활용하여 얼굴, 볼, 혀, 입술 등 구강 구조물에 직접적인 촉진 및 씹기 훈련과 병행하여 응용 기법을 통해 아동이 음식을 잘 섭취할 수 있도록 삼키기 쉬운 위치에 음식을 제공하는 등의 방법을 활용하였다. 수저로 먹기, 빨대컵 잡고 마시기 등 일상생활 접근을 추가로 진행하였다.

2.4 연구 방법

2020년 7월부터 2021년 6월까지 12개월 동안 주 1회, 총 40회의 연하재활치료를 시행하였다. 그 외 추가로 작업치료 주 2회(총 82회)를 시행하였으며 추가의 연하재활치료를 받지 않았다. 연하재활치료는 아동의 발달 및 기능 수준에 따라서 OMFT의 준비 기법, 핵심 기법, 응용 기법 순으로 적용하였다. 치료는 연하 재활 치료실에서 시행하였으며 회기별 치료 시간은 30분이었다. 전반적인 발달 평가, 섭식 및 연하 기능 평가를 치료 초기, 종결 2회 진행하였다.

3. 연구 결과

3.1 전반적 발달

치료 결과 전반적인 발달이 향상되었다. 치료 1-3개월, 몸통 및 고개 조절이 불안정하나 엎드린 자세에서 스스로 뒤집기 가능하였다. 팔을 뻗을 수 있으나 정중선까지 뻗기는 어려웠고 손바닥 잡기(palmar grasp)를 사용하였다. 치료 4-6개월, 몸통 및 고개 조절 증진되면서 양손을 바닥에 지지하여 앉기 시작하고 신체 정중선까지 팔 뻗기 가능하였다. 보호자와 간단한 상호작용이 증가하였고 간단한 행동 모방을 시작하였다. 치료 7-9개월, 바닥과 의자에 독립적으로 앉기 가능하고 배밀이로 이동을 시작하였다. 또한 굽어쥐기, 원하는 것 가리키기 가능하였고 양손에 장난감을 쥐고 부딪치는 놀이 행동을 보였으며 박수 치기, 바이 바이 등 행동 모

방이 증가였다. 치료 10-11개월, 네발기기를 시작하여 약 2m 이동할 수 있고 잡고 서기를 시작하였고, 손가락 집기(pincer grasp)를 사용하고 통 안에 물건을 넣고 빼는 놀이 수준을 보였다. 또한 책상 닦기 등의 행동 모방이 가능하고 낙서를 시작하였으며 웅얼이가 증진되었다. 치료 12개월, 교정연령 20개월에 실시한 DDST-II 평가 결과, 개인-사회성 발달과 미세운동 및

적응 발달 13~15개월, 언어발달과 운동발달 10~11개월로 나타났다. 평가 항목에서 집안일 흉내 내기, 연필로 낙서하기 가능하였고, 재잘거리기, 한 음절 말하기 가능한 모습을 보였다. 붙잡고 서기 및 네발기기로 5m 이상 이동 가능하였다.

Table 3. Monthly feeding treatment and feeding development outcome

Mts	Sitting	Food	Feeding development	Feeding Tx	General Development
1-3	•Feeder seat	Formula	<ul style="list-style-type: none"> •NG-tube / Face, cheek stiffness(+) •Oral orientation(+)/ Reaction to stimulation(+) •Oral adaptation(+)/ Nasal breathing(±) 	<ul style="list-style-type: none"> •OMFT Warming up technique 	<ul style="list-style-type: none"> •Head control(±) •Roll over(+) •Reaching arm(±)
4		Formula	<ul style="list-style-type: none"> •NG-tube weaning •Bottle feeding : Latching(-), sucking power(-), endurance(2min), efficiency(-) •Breathing control(±) : 3-4 sucking / 2-3 coughs •Drooling / Nasal breathing(±) 	<ul style="list-style-type: none"> •OMFT Warming up technique Key point technique 	<ul style="list-style-type: none"> •Head control(+) •Independent sitting (±) •Reaching arm to midline •Simple interaction with caregiver •Start imitation actions
5	•Feeder seat	Bottle feeding	<ul style="list-style-type: none"> •Latching, efficiency(±) : 5-6 sucking •Breathing control(±) •Sucking endurance(5min) / Leakage 	<ul style="list-style-type: none"> •OMFT Warming up technique Key point technique 	
		Baby food (Lv. 1)	<ul style="list-style-type: none"> •Munching •Voluntary swallowing(±) / No leakage •Orientation(+)/ Clean from spoon(+) •Baby rice snack : Self finger feeding / Bite out •Munching(+): Move to molar(+) 	<ul style="list-style-type: none"> •OMFT Warming up technique Key point technique Application technique 	
6		Baby food (Lv. 2)	<ul style="list-style-type: none"> •Bottle feeding : 8-10 sucking / No leakage / Breathing control(+)/ Self holding bottle •Imitation spoon feeding •Straw : Control(±) / Swallowing with straw(-) 1Suck-1Swallow-1Breathing control / Cough 	<ul style="list-style-type: none"> •OMFT Warming up technique Key point technique Application technique •ADL training 	
7-9	<ul style="list-style-type: none"> •Booster chair •Booster chair + desk 	Baby food (Lv. 3)	<ul style="list-style-type: none"> •Soft solid food (rice, grounded, chopped meat, stew, tofu, stir fried vegies(potato, radish, zucchini, carrot)) •Move food to side / Tongue lateralization •Straw : 5-6 sucking / Swallowing with straw in mouth 	<ul style="list-style-type: none"> •OMFT Key point technique Application technique •ADL training 	<ul style="list-style-type: none"> •Independent sitting(+) •Bench sitting •Creeping •Imitate actions •Indicate wants
10	<ul style="list-style-type: none"> •Booster chair + desk •Floor seat + desk 	Baby food (Lv. 3)	<ul style="list-style-type: none"> •Soft solid food (rice / grounded, chopped meat / steamed tofu / stir fried vegies(potato, radish, zucchini, carrot)) •Self spoon feeding(±) / Munching •Left food in hard palate 	<ul style="list-style-type: none"> •OMFT Key point technique Application technique •ADL training 	<ul style="list-style-type: none"> •Crawling(±) •Pull to standing(±) •Pincer grasp •In and out play •Imitate actions (using cup, knife, wiping desk) •Scribble •Babbling
11	•Floor seat + desk		<ul style="list-style-type: none"> •Soft solid food, vegies(1cm ×1cm), baked tofu •Self spoon feeding(±) / Finger feeding(+) •Increasing quantity : 1/2 spoonful of food •Eat rice and side dish together / No leakage •Move to side / Immature chewing start •Straw : Self feeding / 2-3 sucking 		
12	<ul style="list-style-type: none"> •Floor seat + desk •Therapy chair 	Normal food	<ul style="list-style-type: none"> •Soft solid food, Vegies(1cm ×1cm), Baked tofu •Increasing quantity : Spoonful of food •Eat rice and side dish together : Chew and swallow •Straw : 4-5 sucking and more 		
			<ul style="list-style-type: none"> •Quail egg 1/4, steamed zucchini, eggplant(1.5cm), cashew nut, peach •Self spoon feeding(±) •Quail egg, cashew nut, peach : Move to side / Immature chewing start / Swallowing •Steamed zucchini, eggplant : Can't chew enough to swallow •Quail egg 1/2 : Chewing and swallowing 		

3.2 섭식 발달

Table 3의 내용과 같이 OMFT를 중심으로 한 연하 재활치료 결과 대상 아동의 섭식발달이 향상되었다. 치료 1-3개월, 집중적인 OMFT 치료를 통한 구강, 감각 적응 및 비강 호흡 훈련을 진행하였다. 치료 4-6개월, 초기에 이유식을 섭취하는 구강 식이로 전환하였으며 (tube weaning) 아기 과자 등 다양한 질감의 음식을 먹기 시작하였다. 이후 이유식 2단계로 전환되고 빨대컵 사용을 시작하였다. 손으로 유아용 과자를 잡고 스스로 입에 넣고 잘라낸 후(bite out) 어금니 쪽으로 옮겨 오물거리면서 먹기가 관찰되었다. 치료 7-9개월, 식이용 의자(feeder seat)에서 부스터 의자(booster chair)로 자세 조절 정도가 좋아졌으며 이유식 3단계로 전환되며 음식 질감의 변화가 나타났다. 치료 10-13개월, 바닥에서 앉거나 보조 의자에 앉아서 스스로 수저에 있는 음식을 입으로 가져가거나, 어금니 쪽으로 음식 옮겨 씹어서 1cm 정도 덩어리가 있는 음식 처리, 구운 두부, 메추리알, 캐슈넛 등의 고형 음식 삼키기가 가능해졌다.

빨대 마시기에서도 발달적 변화가 관찰되었는데 치료 초기 빨기 마시기 비율이 1대 1로 효율성이 낮고 비강 호흡 등 호흡 조절이 어려워 흘리고 기침을 하며 빨대를 문 채로 물을 삼키기 어려웠다. 치료 7-9개월, 빨대를 물고 비강 호흡을 통해 빨대 빨기를 유지하고 그 이후에는 점차적으로 빨기 비율이 높아져 흡인 없이 안전하고 효율적인 빨대 빨기를 수행하였다. 질적인 변화에서는 식사 시 구강 호흡에서 비강 호흡으로 전환, 빨대 컵 사용 시 SSB 조화 증진, 기침 횟수 저하 등을 확인할 수 있다.

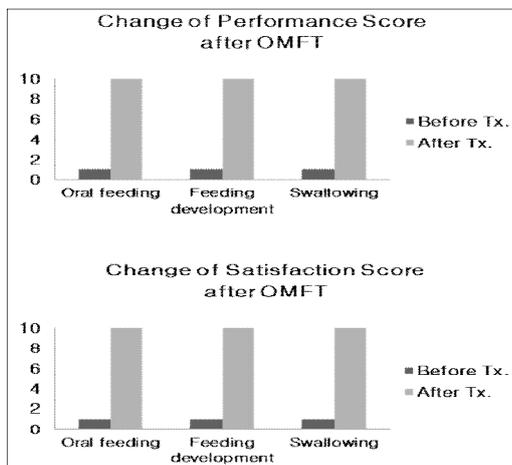


Fig. 1. Changes of COPM after OMFT in PWS infant

OMFT 적용 후 COPM 결과는 Fig. 1과 같이 치료 초기 구강 섭식과 발달에 맞는 섭식, 삼킴 능력 모두 수행도, 만족도 1에서 치료 후 세 항목 모두 수행도, 만족도 10으로 증진되었다.

4. 고찰

본 연구는 PWS 영유아 아동의 1년간의 구강운동측진기술(OMFT)를 활용한 조기 연하재활치료 결과 및 효과를 발달 단계에 따라 분석하고 소개하기 위한 목적으로 진행되었다.

20개월 미만 아동의 섭식 및 연하장애를 종합적으로 평가할 수 있는 평가도구가 부족하여 발달 수준에 따라 확인한 결과, 치료 3개월 후 구강 식이로 전환하여 단계적으로 이유식을 먹기 시작하였고 치료 종결 시점에는 일반식 섭취가 가능하였다. 치료 초기에는 음식을 혀와 입천장을 사용하여 오물거림(munching) 형태로 먹다가 치료가 진행되면서 어금니 쪽으로 이동하여 씹어서 먹었으며 치료 종결 시점에는 메추리알 반 쪽, 캐슈넛을 씹어 먹을 수 있었다. 빨대 컵 마시기에서도 치료 초기 한 번 빨고 삼키고, 비강 호흡 조절이 어려워 목에 걸려 기침을 하기도 하였으나, 치료가 진행될수록 빠는 비율이 점차 증가하고 빨대를 문 채로 비강 호흡을 하면서 빨대 컵을 마시는 등 빨기 기능이 향상되었다. 이러한 결과는 연하재활치료 후 PWS 신생아 20명의 구강식이 전환 기간 단축을 확인한 선행연구[8]의 결과와 일치하는 것이다. Wang 등[8]의 연구에서는 자세한 연하재활치료 방법이 제시되지 않았으나, 물리치료 등 발달에 영향을 줄 수 있는 재활치료를 함께 진행하였다. 장애 아동의 특성상 집중적이고 종합적인 중재가 중요하며 운동 및 인지 발달은 섭식 능력 및 수저 사용하기 등 섭식 관련 일상생활에도 영향을 미치기 때문에[11] 영유아 아동에게 작업치료 등 전반적인 발달 증진을 위한 종합적인 적용을 함께 고려하는 것이 좋을 것으로 보인다.

본 연구에 참여한 아동은 치료 후 3개월에 경관식에서 구강식으로 전환하였는데 이는 90~100%의 PWS 신생아가 경관식을 경험한다고 한 이전 연구[8]의 보고와 같이 경관식이 PWS아동의 구강식이 전환이 주요한 연하재활치료의 목표 중 하나가 될 수 있음을 시사한다. 따라서 본 연구 결과를 토대로 OMFT가 PWS 아동의 구강식이 전환을 위해 고려될 수 있는 구

강운동치료 방법임을 확인하였다.

본 연구에 참여한 아동은 조산 아들이기도 하였는데 구강운동치료가 조산 아동의 퇴원 기간 단축, 구강식이 전환 등에 효과적이었다고 보고한 사전 연구[23]의 결과와 비교하였을 때도 OMFT 등 종합적인 구강운동치료 접근이 조산으로 태어난 PWS 아동 섭식 발달에 효과적인 방법임을 뒷받침한다. 또한 조산 아동의 구강운동 문제 중 하나인 저긴장성은 PWS의 주요 특징이기 때문에 PWS 아동의 구강운동기능 및 섭식발달 향상을 위한 구강운동치료 적용 효과를 확인할 수 있었다.

PWS와 같은 진단은 아니지만 누난 증후군, 바테르 증후군 등 희귀질환 아동의 연하재활치료 효과를 소개한 이전의 연구들에서 확인된 결과처럼[19,20], 다양하고 종합적인 연하재활치료 특히 영유아 초기 섭식발달 및 기능 향상에 필수적인 구강운동문제에 대한 접근이 중요하며 아직 그 효과성에 대한 치료 논문이 부족한 PWS아동에게도 초기의 연하재활치료 적용의 효과성을 기대해 볼 수 있는 부분으로 생각된다.

치료 결과 대상 아동은 발달 단계에 따른 섭식 발달을 보였다. 아동의 전반적인 발달은 섭식 발달에 영향을 미치며 섭식 기능 발달 역시 단계적으로 이루어진다[11]. 예를 들어 젖병 빨기에서 발달 초기에는 SSB 조화 비율이 각 1회씩이었던 것에서 구강운동기능이 발달할수록 빠는 횟수가 증가하고 호흡 협응이 향상된다[24]. 또한 음식을 입안에서 어금니로 옮긴 후 씹고 다시 혀 가운데로 옮겨서 삼키는 등 다양한 질감의 음식을 처리하는 구강 구조물의 협응이 발달하면서 고체 음식도 처리할 수 있게 된다[11]. 따라서 발달적으로 중요한 시기(critical period)에 전문가의 적절한 자극 및 치료적 접근이 아동의 섭식 및 구강운동 발달에 매우 중요하다[11,13]. 본 연구에서도 아동은 몸통 및 머리 조절, 혼자서 앉기, 주변 환경에 적극적으로 반응하기, 도구 사용하기 등 섭식의 안정성 및 효율성에 영향을 줄 수 있는 운동 및 미세협응, 인지 능력의 발달이 함께 이루어짐을 알 수 있었다.

마지막으로 COPM 응답 결과 구강 섭식, 발달에 맞는 섭식, 삼킴 능력 모두에서 수행도와 만족도가 치료 전 1점에서 치료 후 10점으로 유의미한 차이를 보여 OMFT가 직접적인 섭식 기능 향상 뿐 아니라 보호자의 만족도에도 긍정적인 영향을 줄 수 있음을 확인하였다.

본 연구를 통하여 PWS 아동의 전반적인 발달과 섭

식발달을 비교, 분석하여 발달적 관점에서 치료 진행에 따른 발달 변화를 확인할 수 있었다. PWS 아동의 섭식 및 연하재활 치료 접근에 대한 연구가 부족한 상황에서 본 연구는 OMFT를 활용한 연하재활치료를 통해 PWS 영유아의 조기 연하재활치료의 필요성 및 효과를 확인할 수 있었다. 또한 OMFT를 통해 구강감각자극 및 인식 증진, 비강 호흡 등을 통한 SSB 협응 향상이 흡인 감소, 삼킴 안정성 향상에 미치는 긍정적 효과를 확인할 수 있었으며 이를 통해 구강 식이로의 전환을 위한 구강운동치료의 효과를 알 수 있었으며 보호자 만족도가 향상되었다.

본 연구의 제한점은 1명의 PWS 아동을 대상으로 한 사례 연구로 일반화가 어렵다. 아동은 성장과 발달로 인한 효과도 무시할 수 없기 때문에 OMFT의 단독적인 효과가 어느 정도인지에 대한 확인이 어렵다. 또한 PWS 아동의 발달 및 기능 수준은 아동에 따라 치료 효과가 다르고 본 연구에 참여한 아동은 느리지만 꾸준히 성장 및 발달이 이루어져 그에 따라 빠른 섭식 발달 역시 나타난 아동으로 대상 아동의 상황에 따라 치료 효과 및 기간이 달라질 수 있다.

희귀질환 아동은 대상자의 발달 수준 및 기능의 차이가 크고 그룹 연구를 할 만큼 충분한 수의 대상자 모집이 어렵다. 또한 대조군을 설정하더라도 윤리적인 이유로 치료를 제공하지 않을 수 없기 때문에 추후 지속적인 개별 사례연구(single study) 방법을 통한 꾸준한 사례 확보가 중요할 것으로 생각된다. 추후 연구에서는 다양한 희귀질환 아동의 조기 연하재활치료, 특히 OMFT의 효과를 확인하는 연구가 필요할 것으로 보이고 상황이 허락한다면 많은 수의 대상을 확보하여 무작위 대조군 집단 연구를 통한 치료 효과 확인이 이루어져야 할 것이다. 또한 장기간의 치료뿐 아니라 국내 외래 치료 상황, 낮병원 입원 상황에 맞는 적절한 치료 기간에 대한 확인도 필요할 것으로 보인다.

본 연구를 통해 확인된 임상적 의의는 다음과 같다. PWS 아동의 조기 연하재활치료, 구강운동치료 접근이 중요하다. PWS 아동의 섭식 및 연하기능, 구강운동기능 증진을 위해 구강운동촉진기술(OFMT) 적용은 효과적이다. 연하재활치료와 작업치료 등 포괄적인 재활치료의 접근이 필요하다.

5. 결론

본 사례연구는 1세 미만의 PWS 영유아 아동의 섭식 발달 수준을 확인하고, OMFT가 대상 아동의 섭식발달에 미치는 효과를 알아보고자 진행되었다. 치료 기간은 약 1년(2020년 7월 ~ 2021년 6월)이었으며, 주 2회의 작업치료, 주 1회의 OMFT를 적용한 조기 연하재활치료를 각각 30분 실시하였다. 1년간의 OMFT 적용 결과 치료 초기 식이용 관(NG tube)을 통한 식이에서 구강으로 스스로 먹기가 시작되었으며, 3~4번의 빨기 후 삼키고 코로 숨을 쉬어 원활한 빨대 빨기가 가능하는 등 섭식발달의 향상을 확인할 수 있었다. 음식 종류도 치료 전 식이용 관을 통해 액체 음식을 섭취하였으나 치료 후기에는 진밥, 직경 1cm 정도의 무른 음식(두부, 구운 호박, 부드러운 닭고기, 삶은 감자 등)을 어금니로 씹어서 삼킬 수 있었으며 치료 후기에는 견과류 중 부드러운 캐슈넛을 씹어서 삼킬 수 있었다.

PWS 아동은 영유아 시기에 발달 지연과 근긴장도 및 근력 저하 등으로 젖병 빨기 등 섭식 및 구강운동기능 저하가 특징으로 이로 인한 섭식발달, 영양섭취 등에 제한을 받을 수 있어 평가를 통해 나타난 문제 해결을 위한 조기 연하재활치료가 필요하다. 특히 어린 연령의 대상자들에게 구강운동치료 접근을 통한 감각, 인식, 자세, 구강운동 경험 및 발달 증진의 종합적인 접근이 필요할 것으로 보인다.

본 연구 결과를 통하여 PWS 아동의 조기 구강운동치료 접근이 대상자의 경험 및 기능 발달을 촉진시키는 주요한 방법임을 확인하였고 추후 임상 전문가들이 PWS 아동의 연하재활치료에 있어 참고할 수 있는 이론적 근거가 되기를 바란다.

REFERENCES

- [1] D. K. Jin. (2011). Systematic review of the clinical and genetic aspects of Prader-Willi syndrome. *Korean journal of pediatrics*, 54(2), 55-63. DOI : 10.3345/kjp.2011.54.2.55
- [2] C. Fridman, F. Kok & C. P. Koiffmann. (2000). Hypotonic infants and the Prader-Willi syndrome. *Jornal de Pediatria (Rio J)*, 76(3), 246-250. DOI : 10.2223/jped.66
- [3] M. Gunay-Aygun, S. Schwartz, S. Heeger, M. A. O'Riordan & S. B. Cassidy. (2001). The changing purpose of Prader-Willi syndrome clinical diagnostic criteria and proposed revised criteria. *Pediatrics*, 108(5), e92. DOI : 10.1542/peds.108.5.e92
- [4] P. Salehi et al.(2017). Silent aspiration in infants with Prader-Willi syndrome identified by videofluoroscopic swallow study. *Medicine*, 96(50), e9256. DOI : 10.1097/MD.0000000000009256
- [5] C. J. McAllister, J. E. Whittington & A. J. Holland. (2011). Development of the eating behaviour in Prader-Willi Syndrome: advances in our understanding. *International Journal of Obesity*, 35(2), 188-197. DOI : 10.1038/ijo.2010.139
- [6] R. Saeves, P. Åsten. K. Storhaug & M. Bågesund. (2011). Orofacial dysfunction in individuals with Prader-Willi syndrome assessed with NOT-S. *Acta Odontologica Scandinavica*, 69(5), 310-315. DOI : 10.3109/00016357.2011.568961
- [7] B. A. Lewis. (2006). Speech and language disorders associated with Prader-Willi syndrome. In Management of Prader-Willi Syndrome. In Butler M.G., Lee P.D.K., Whitman B.y.(Eds.), Management of Prader-Willi Syndrome(pp. 272-283). Springer, New York, NY.
- [8] P. Wang, W. Zhou, W. Yuan, L. Huang, N. Zhao & X. Chen. (2016). Prader-Willi syndrome in neonates: twenty cases and review of the literature in Southern China. *BMC pediatrics*, 16(1), 1-6. DOI : 10.1186/s12887-016-0662-2
- [9] M. G. Butler, J. L. Miller & J. L. Forster. (2019). Prader-Willi syndrome-clinical genetics, diagnosis and treatment approaches: an update. *Current pediatric reviews*, 15(4), 207-244. DOI : 10.2174/1573396315666190716120925
- [10] F. M. Çizmecioglu et al. (2018). Neonatal features of the Prader-Willi syndrome; the case for making the diagnosis during the first week of life. *Journal of clinical research in pediatric endocrinology*, 10(3), 264-273. DOI : 10.4274/jcrpe.0029
- [11] S. E. Morris & M. D. Klein. (2000). *Pre-feeding skills: A comprehensive resource for mealtime development*. San Antonio, TX: Therapy Skill Builders.
- [12] J. Case-Smith & J. C. O'Brien. (2015). *Occupational therapy for children and adolescents 7th edition*. St. Louis : Elsevier.

[13] K. C. Min, S. M. Seo & H. S. Woo. (2021). Oral-Motor Facilitation Technique (OMFT): Part I-Theoretical Base and Basic Concept. *Therapeutic Science for Rehabilitation*, 10(1), 37-52.
DOI : 10.22683/tsnr.2021.10.1.037

[14] K. C. Min, S. M. Seo & H. S. Woo. (2021). Oral-Motor Facilitation Technique (OMFT): Part II-Conceptual Hierarchy and Key Point Technique. *Therapeutic Science for Rehabilitation*, 10(1), 53-61.
DOI : 10.22683/tsnr.2021.10.1.053

[15] L. Cooper-Brown et al. (2008). Feeding and swallowing dysfunction in genetic syndromes. *Developmental disabilities research reviews*, 14(2), 147-157.
DOI : 10.1002/ddrr.19

[16] C. J. Manno, C. Fox, P. S. Eicher & M. E. Kerwin. (2005). Early oral-motor interventions for pediatric feeding problems: What, when and how. *Journal of Early and Intensive Behavior Intervention*, 2(3), 145-159.
DOI : 10.1037/h0100310

[17] L. Voniati, A. Papaleontiou, R. Georgiou & D. Tafiadis. (2021). The Effectiveness of Oral Sensorimotor Intervention in Children with Feeding Disorders. *Current Developmental Disorders Reports*, 1-11.
DOI : 10.1007/s40474-021-00236-y

[18] K. Sharma, S. Tengsupakul, O. Sanchez, R. Phaltas & P.Maertens. (2019). Guillain-Barré syndrome with unilateral peripheral facial and bulbar palsy in a child: a case report. *SAGE Open Medical Case Reports*, 7, 1-5.
DOI : 10.1177/2050313X19838750

[19] I. J. Yoon. (2020). The effect of swallowing therapy on child of Noonan syndrome-A case report. *Swallowing Rehabilitation*, 3(1), 1-9.
DOI : 10.31115/sr.2020.3.1.1

[20] I. J. Yoon & J. H. Shin. (2018). The swallowing therapy for child with VACTERL syndrome-A case report. *Swallowing Rehabilitation*. 1(2), 41-51.
DOI : 10.31115/sr.2018.1.2.41

[21] H. S. Shin, B. S. Kwon & S. O. Lim. (2005). Validity of Korean version of Denver II in screening children with developmental risk. *Child Health Nursing Research*, 11(3), 316-321.

[22] A. Carswell, M. A. McColl, S. Baptiste, M. Law, H. Polatajko & N. Pollock. (2004). The Canadian Occupational Performance Measure: a research

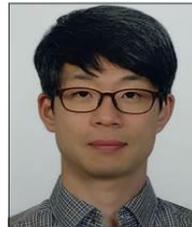
and clinical literature review. *Canadian journal of occupational therapy*, 71(4), 210-222.
DOI : 10.1177/000841740407100406

[23] S. Fucile, E. G. Gisel & C. Lau. (2005). Effect of an oral stimulation program on sucking skill maturation of preterm infants. *Developmental medicine and child neurology*, 47(3), 158-162.
DOI : 10.1017/S0012162205000290

[24] R. M. Sampallo-Pedroza, L. F. Cardona-López & K. E. Ramírez-Gómez. (2014). Description of oral-motor development from birth to six years of age. *Revista de la Facultad de Medicina*, 62(4), 593-604.
DOI : 10.15446/revfacmed.v62n4.45211

민 경 철(Kyoung-Chul Min)

[정회원]



- 2008년 8월 : 연세대학교 보건과학대학원 작업치료학과(작업치료학석사)
- 2020년 3월 ~ 현재 : 원광대학교 의과대학 작업치료학과(작업치료학 박사과정)
- 2007년 6월 ~ 현재 : 서울특별시 어린이병원 재활의학과 작업치료사

· 관심분야 : 연하재활치료, 아동작업치료
· E-Mail : minmogun@naver.com

김 보 경(Bo-Kyeong Kim)

[정회원]



- 2019년 2월 : 동남보건대학교 작업치료과(작업치료학전문학사)
- 2020년 4월 ~ 현재 : 서울특별시 어린이병원 재활의학과 작업치료사
- 관심분야 : 연하재활치료, 아동작업치료

· E-Mail : jellybk@naver.com